



TITLE:

精巣に発生した形質細胞腫が多発性骨髄腫に移行した1例

AUTHOR(S):

松田, 洋平; 加藤, 隆一; 宮尾, 則臣; 佐藤, 修司; 小西, 康宏; 今, 信一郎

CITATION:

松田, 洋平 ...[et al]. 精巣に発生した形質細胞腫が多発性骨髄腫に移行した1例. 泌尿器科紀要 2010, 56(10): 593-595

ISSUE DATE:

2010-10

URL:

<http://hdl.handle.net/2433/130810>

RIGHT:

許諾条件により本文は2011-11-01に公開

精巣に発生した形質細胞腫が多発性骨髄腫に移行した1例

松田 洋平¹, 加藤 隆一¹, 宮尾 則臣¹

佐藤 修司², 小西 康宏³, 今 信一郎³

¹市立室蘭総合病院泌尿器科, ²同消化器科, ³同臨床検査科

A CASE OF EXTRAMEDULLARY PLASMACYTOMA OF TESTIS CONVERTED TO MULTIPLE MYELOMA

Yohei MATSUDA¹, Ryuichi KATO¹, Noriomi MIYAO¹,
Syuji SATO², Yasuhiro KONISHI³ and Shinichiro KON³

¹The Department of Urology, Muroran City General Hospital

²The Department of Gastroenterology, Muroran City General Hospital

³The Department of Pathology, Muroran City General Hospital

A 55-year-old male was referred to our hospital with the chief complaint of painless right scrotal swelling. Serum tumor marker levels were all within the normal range. A right radical orchiectomy was performed and the histopathological diagnosis was plasmacytoma. Chest and abdominal computed tomographic scan and bone scintigraphy did not show metastasis. Serum and urine protein electrophoresis and bone marrow biopsy were negative. Diagnosis was primary testicular plasmacytoma (extramedullary plasmacytoma). Eleven months after the operation, multiple bone lesions appeared and our diagnosis was conversion to multiple myeloma.

(Hinyokika Kyo 56 : 593-595, 2010)

Key words : Extramedullary plasmacytoma, Testis

緒 言

髄外性形質細胞腫は全形質細胞腫の4%に過ぎず、発生部位の約80~90%は上気道が占めると報告されている^{1,2)}。今回、非常に稀である精巣原発の髄外性形質細胞腫が多発性骨髄腫に移行した症例を経験したので報告する。

症 例

患者：55歳，男性

主訴：無痛性右陰嚢腫大

既往歴：特記事項なし

家族歴：特記事項なし

現病歴：2006年8月，無痛性右陰嚢腫大を自覚し，当科初診。右精巣腫瘍疑いにて精査加療目的に当科入院となった。

入院時現症：身長166cm，体重77kg。右精巣に手拳大・弾性硬の腫瘍を触知し，圧痛は認めなかった。

検査所見：血清AFP 2.1 ng/ml，血清HCG-β 0.1 未満，血清LDH 155 IU/l と基準値内であり，血算・生化学所見に異常値を認めなかった。

画像所見：右精巣はMRI T2 強調画像にて低信号を一部示す内部不均一像および陰嚢水腫を認めた(Fig.

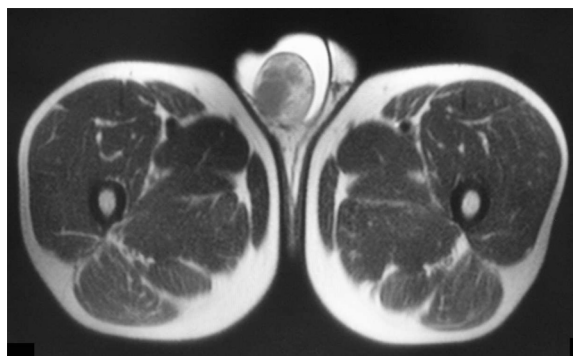


Fig. 1. T2-weighted MRI shows right testicular tumor which has low intensity area and hydrocele.

1). 胸腹部CTでは明らかな異常所見を認めず，骨シンチにおいても異常集積を認めなかった。

入院後経過：2006年8月下旬に根治的右精巣摘除術を施行した。摘出物は159g，右精巣に50×30×30mmの境界明瞭で一部に出血を伴う黄白色充実性腫瘍を認めた。精巣は大部分が腫瘍に置き換わっており，正常精巣はわずかに認めるのみであった(Fig. 2)。

病理所見：車軸状を呈する円形の核が偏在する異型形質細胞が精細管周囲にびまん性に浸潤する像を認めた。免疫組織所見はCD79aで陽性を呈し，CD20で

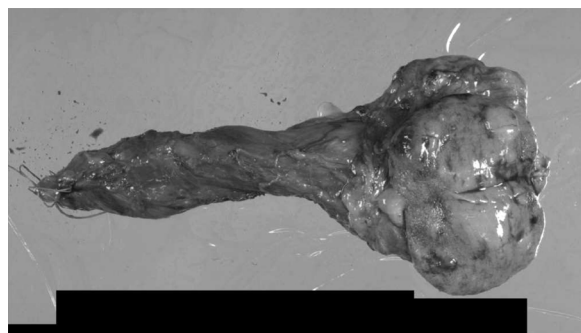
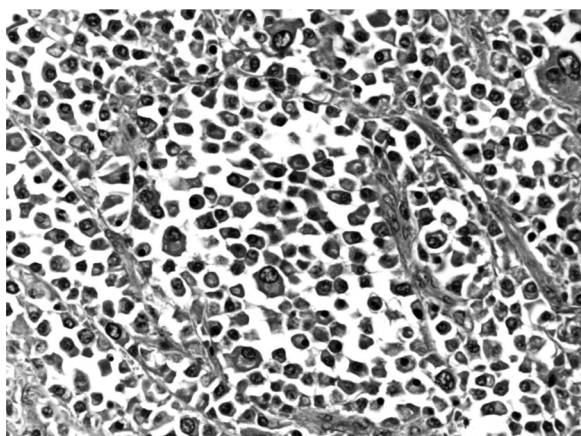
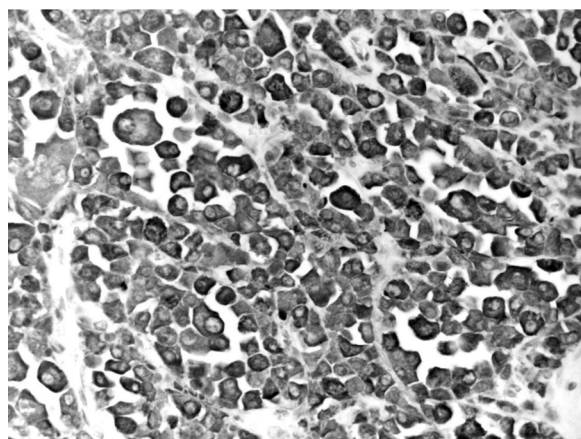


Fig. 2. Macroscopic appearance of surgical specimen.



A



B

Fig. 3. Histopathological examination revealed the tumor was plasmacytoma (A: HE stain $\times 400$, B: CD79a $\times 400$).

は陰性であった (Fig. 3). グロブリン軽鎖の染色は λ 鎖が陽性、 κ 鎖は陰性であり、monoclonality が確認された。また術中に採取した陰嚢内容液の細胞診でも異型形質細胞を認めた。以上より形質細胞腫と診断した。

追加検査：血清・尿中M蛋白は陰性、尿中 Bence Jones 蛋白 (BJP) は陰性であった。また、骨髓穿刺を施行するも形質細胞の clonal な増殖は認めなかった。以上の結果および、術前検査 (CT・MRI・骨シンチ) にて転移・骨病変を認めなかったことから、精巣に発

生した髄外性形質細胞腫と診断した。

経過：術後追加治療を施行せずに経過観察としたが、2007年7月 (術後11カ月) の CT にて左第8・9肋骨に骨病変を認め、同部位に対し放射線治療 (50 Gy) を施行した。以上の経過より精巣に発生した髄外性形質細胞腫が多発性骨髄腫へ移行したと判断し、標準化学療法である VAD 療法 (VCR + ADM + DEX) を開始した。2コース目終了時に DEX 投与による耐糖能異常が出現し、その後も血糖コントロール不良な状態が継続し、十分な治療効果を得られずに VAD 療法は中断となった。

以後は積極的な治療を望まれず、ゾレドロン酸投与、また新たに出現する骨病変に対して随時、放射線治療を施行した。

2008年10月に本邦で多発性骨髄腫に対するサリドマイド投与が承認されたことを期に、本症例でも2009年5月よりサリドマイド (100 mg/日) 投与を開始した。サリドマイド投与後は新骨病変の出現なく、現在 (2010年5月) まで経過している。

考 察

髄外性形質細胞腫は全形質細胞腫の4%を占める¹⁾。2003年の International Myeloma Working Group (IMWG) の国際診断基準は、①血清および尿にM蛋白を検出しない、② clonal な形質細胞による髄外腫瘍、③正常骨髓、④正常な全身骨所見、⑤臓器障害がないこと、とされている³⁾。また、発生部位は上気道 (口腔・鼻咽頭・副鼻腔・咽頭) が最も多く、約80~90%を占めるとされ、続いて、消化管 (胃・結腸)、皮膚、尿路系 (腎・膀胱) が多いと報告されている¹⁾。

精巣原発の形質細胞腫は非常に稀で、われわれが検索しえた限りで、本邦で7例の報告があり、本症例は8例目であった (Table 1)⁴⁻¹⁰⁾。年齢の中央値は74.5歳 (55~86歳)、腫瘍最大径は40~65 mm であった。精巣形質細胞腫から多発性骨髄腫に移行した症例は自験例のみであったが、自験例以外の7例は観察期間が短く、その後の転帰については不明である。また、形質細胞由来の精巣腫瘍自体も稀な疾患であり、Levin らは約6,000例の精巣腫瘍でわずか7例であったと報告している¹¹⁾。また、精巣に発生した形質細胞腫の多くは多発性骨髄腫の精巣転移であることが多く、Castagna らは精巣形質細胞腫57例のうち多発性骨髄腫を合併しない症例は11例¹²⁾、Levin らは上記報告で7例中1例に過ぎなかったと報告している¹¹⁾。本症例では病理検査にて形質細胞腫と診断し、その後の全身精査で IMWG 診断基準を満たした髄外性形質細胞腫と診断した。

本症例では根治的右精巣摘除術後、約11カ月で新規骨病変が出現し、髄外性形質細胞腫から多発性骨髄腫

Table 1. Summary of primary testicular plasmacytoma in Japan

報告者	年齢	主訴	大きさ	治療	転帰	観察期間	MM への移行
村上ら (1983)	68	左陰嚢腫大	55×35×32 mm	根治的左精巣摘除術	生存	14 M	なし
島田ら (1995)	83	左無痛性陰嚢腫大	40×35×25 mm	根治的左精巣摘除術	生存*骨盤内再発	14 M	なし
藤田ら (1997)	64	右無痛性陰嚢腫大	65×35×35 mm	根治的右精巣摘除術	生存	6 M	なし
鈴木ら (2001)	86	右陰嚢腫大	不明	根治的右精巣摘除術	生存	9 M	なし
高橋ら (2003)	77	左陰嚢腫大	鶏卵大	根治的両側精巣摘除術	生存	6 M	なし
三浦ら (2005)	78	右陰嚢腫大	不明	右精巣摘除術	不明*皮膚転移	不明	なし
船橋ら (2007)	72	右無痛性陰嚢腫大	不明	根治的右精巣摘除術	不明	不明	なし
自験例 (2010)	55	右無痛性陰嚢腫大	50×30×30 mm	根治的右精巣摘除術	生存	45 M	あり (11 M)

へ移行したと判断し、追加治療を開始した。Alexiou らは上気道発生の髄外性形質細胞腫は22.0%が再発を認め、16.1%が多発性骨髄腫に移行し、また上気道を除いた髄外性形質細胞腫では21.2%が再発を認め、14.1%が多発性骨髄腫に移行したと報告している¹⁾。一方で精巣原発の髄外性形質細胞腫から多発性骨髄腫に移行したとする報告も散見される。Anghel らは精巣原発の形質細胞腫で35.3% (17例中6例)が多発性骨髄腫に移行し、その予後は不良で2~36カ月と報告している¹³⁾。精巣原発である形質細胞腫の場合はより厳密な follow up が必要と考えられる。

髄外性形質細胞腫と多発性骨髄腫が併存した場合、髄外性形質細胞腫から多発性骨髄腫に移行したと考えるか、髄外性形質細胞腫が多発性骨髄腫の前段階病態ととらえるかが問題となるが、Turk らは後者が common opinion であると報告している¹⁴⁾。

髄外性形質細胞腫に対する治療としては外科的摘除術、放射線治療、外科的摘除術+放射線治療が挙げられる。過去の報告では限局性の精巣形質細胞腫に対してはほぼ全例において根治的精巣摘除術が施行されている。そして、局所再発・多発性骨髄腫に移行しない限りは化学療法・放射線療法などの追加治療は施行されていない。本症例も過去の報告と同様に術後は追加治療を施行せずに経過観察としたが、結果的に術後11カ月で多発性骨髄腫に移行した。多発性骨髄腫移行後の予後は非常に不良であるものの、現状では術後補助化学療法は推奨されていない。今後は少ないながらも症例を重ね、検討していくことにより、適切な術後 follow up を考察していくことが期待される。

結 語

右精巣を原発とした髄外性形質細胞腫が根治的右精巣摘除術後11カ月で多発性骨髄腫に移行した症例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告した。

文 献

- 1) Alexiou C, Kau RJ, Dietzfelbinger H, et al.: Extramedullary plasmacytoma: tumor occurrence and

- therapeutic concepts. *Cancer* **85**: 2305-2314, 1999
- 2) Soutar R, Lucraft H, Jackson G, et al.: Guidelines on the diagnosis and management of solitary plasmacytoma of bone and solitary extramedullary plasmacytoma. *Br J Haematol* **124**: 717-726, 2004
- 3) Criteria for the classification of monoclonal gammopathies, multiple myeloma and related disorders: a report of the International Myeloma Working Group. *Br J Haematol* **121**: 749-757, 2003
- 4) 村上竜夫, 梅津 徹, 神代正道, ほか: 睾丸形質細胞腫の1例. *久留米医学会誌* **46**: 1041-1043, 1983
- 5) 島田智子, 小島 貴, 赤嶺 亮, ほか: 陰嚢穿刺細胞診にて診断しえた睾丸形質細胞腫の1例. *日臨細胞学会誌* **34**: 1156-1159, 1995
- 6) 藤田信司, 能中 修, 富樫正樹, ほか: 精巣形質細胞腫の1例. *泌尿器外科* **10**: 280, 1997
- 7) Suzuki K, Shioji Y, Morita T, et al.: Primary testicular plasmacytoma with hydrocele of the testis. *Int J Urol* **8**: 139-140, 2001
- 8) 高橋尚子, 熊谷仁平, 小林博仁, ほか: 両側精巣に発生した原発形質細胞腫の1例. *泌尿器外科* **16**: 251, 2003
- 9) 三浦由宏, 三砂範幸, 古場慎一, ほか: 皮膚腫瘍を形成した精巣原発の髄外性形質細胞腫の1例. *Skin Cancer* **20**: 166-170, 2005
- 10) 船橋 亮, 山田哲夫, 村山鉄郎, ほか: 精巣に発生した原発性形質細胞腫の1例. *泌尿器外科* **20**: 391, 2007
- 11) Levin HS and Mostofi FK: Symptomatic plasmacytoma of the testis. *Cancer* **25**: 1193-1203, 1970
- 12) Castagna M, Gaeta P, Cecchi M, et al.: Bilateral synchronous testicular involvement in multiple myeloma: case report and review of the literature. *Tumori* **83**: 768-771, 1997
- 13) Anghel G, Petti N, Remotti D, et al.: Testicular plasmacytoma: report of a case and review of the literature. *Am J Hematol* **71**: 98-104, 2002
- 14) Turk HM, Komurcu S, Ozet A, et al.: An unusual presentation of extramedullary plasmacytoma in testis and review of the literature. *Med Oncol*, 2009 (Epub ahead of print)

(Received on April 1, 2010)
(Accepted on May 27, 2010)